

PDF hosted at the Radboud Repository of the Radboud University Nijmegen

The following full text is a publisher's version.

For additional information about this publication click this link.

<http://hdl.handle.net/2066/122405>

Please be advised that this information was generated on 2018-07-07 and may be subject to change.

Effectiviteit van laag intensieve gedragstherapie als aanvulling op de reguliere zorg op het kinderdagcentrum of het (ZMLK)-onderwijs aan kinderen met een autisme spectrum stoornis en een verstandelijke beperking

N. Peters-Scheffer, R. Didden, M. Mulders en H. Korzilius

1 Inleiding

Een autisme spectrum stoornis (ASS) is een stoornis die geassocieerd wordt met ernstige beperkingen in de communicatie en sociale interactie en stereotiepe en beperkte patronen van gedrag. ASS heeft een oorsprong in de vroege ontwikkeling (American Psychiatric Association, 2000). Veel personen met ASS hebben daarnaast een verstandelijke beperking (VB) en de meerderheid zal als volwassene niet volledig zelfstandig kunnen functioneren (Mordre et al., 2011; Yeargin-Allsopp et

al., 2003). Gedragsinflexibiliteit, angst, slaap- en eetproblemen, driftbuien, agressie en zelfverwondend gedrag komen bij kinderen met ASS veel voor (o.a., Hartly, Sikora, & McCoy, 2008; McClintock, Hall, & Oliver, 2003).

Hoewel een breed scala aan behandelingen voor kinderen met ASS beschikbaar is, is er voor vroegtijdige intensieve gedragstherapie (VIGT) het sterkste wetenschappelijk bewijs (Eikeseth, 2009; Eldevik et al., 2009; Peters-Scheffer, Didden, Korzilius, & Sturmey, 2011; Reichow & Wolery, 2009; Vismara & Rogers,

Beleid & Management

Laag intensieve gedragstherapie werd toegepast bij kinderen met een autisme spectrum stoornis en een verstandelijke beperking. Er werd gebruik gemaakt van een behandelgroep en van een controle groep die de reguliere behandeling kreeg. Na twee jaar interventie liet de behandelgroep meer vooruitgang dan de controle groep zien op IQ, ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel en receptieve taal. Daarnaast waren er minder autistische symptomen in de behandelgroep en was er in de behandelgroep een significante afname van gedragsproblemen over de tijd.

Het artikel is van belang voor gedragswetenschappers en behandelaars.

WB

2010). Er verschijnt steeds meer onderzoek waaruit blijkt dat VIGT succesvol de kernsymptomen van ASS reduceert en de kans op deelname aan het reguliere onderwijs vergroot (Eikeseth, 2009; Matson & Smith, 2008; Smith, Groen, & Wynn, 2000).

Hoewel VIGT-programma's enigszins van elkaar verschillen, delen ze enkele essentiële kenmerken. Alle programma's maken gebruik van leertheoretische principes afkomstig uit de Applied Behavior Analysis (ABA; toegepaste gedragstherapie). Binnen de ABA wordt alles dat mensen doen gezien als gedrag en consequenties die op het gedrag volgen zullen het gedrag versterken of juist doen afnemen. Wanneer gedrag gevolgd wordt door een gewenste consequentie zal het versterken en toenemen, terwijl gedrag zal afnemen als het niet langer door een gewenste consequentie wordt gevolgd. Door systematisch specifieke consequenties op gedrag te laten volgen, zal de kans op toekomstig gedrag vergroten of juist verkleinen afhankelijk van de consequentie die door de omgeving aangeboden wordt. Dit proces wordt ook wel operant leren genoemd (Granpeesheh, Tarbox, & Dixon, 2009). Gewoonlijk wordt er gebruik gemaakt van Discrete Trial Teaching (DTT) om systematische instructie, herhaling en het gestructureerd aanbieden van taken te waarborgen. Naast DTT worden instructieprocedures gebruikt als prompting, stimulus generalisatie, fading, modelleren, taakanalyse, error correctie, functionele analyse, bekrachtiging en shaping (Duker, Didden, & Sigafos, 2004).

VIGT programma's maken gebruik van een veelomvattend curriculum dat de normale

ontwikkeling volgt, maar wordt afgestemd op het kind. Binnen het curriculum is er ondermeer aandacht voor aandachtsvaardigheden, imitatie, matchen, communicatie en taal, zelfredzaamheid, spel, sociale vaardigheden, (voor)schoolse vaardigheden en gedragproblemen (stereotiep gedrag, zelfverwondend gedrag). Meestal wordt een gedragstherapeutisch programma 30 tot 40 uur per week geïmplementeerd over een periode van minimaal twee jaar. Instructie wordt voornamelijk één-op-één aangeboden, maar stapsgewijs wordt de overgang gemaakt naar (kleine) groepen. Betrokkenheid van ouders is essentieel om generalisatie en het behoud van aangeleerde vaardigheden te faciliteren (Eikeseth, 2009; Green, Brennan, & Fein, 2002; Hayward, Gale, & Eikeseth, 2009; Howlin, Magiati, & Charman, 2009; Peters-Scheffer et al., 2011).

VIGT heeft geleid tot significante verbeteringen bij kinderen met ASS, voornamelijk wanneer de interventie intensief wordt geïmplementeerd (40 uur per week; Eldevik et al., 2010; Granpeesheh, Dixon, Tarbox, Kaplan, & Wilke, 2009; Lovaas, 1987; Reed, Osborne, & Corness, 2007; Reichow & Wolery, 2009), zo vroeg mogelijk start, bij voorkeur voor de leeftijd van drie jaar (Granspeesheh et al., 2009; Harris & Handleman, 2000) en ten minste twee jaar duurt (Reichow & Wolery, 2009). Ook de intensiteit en de kwaliteit van de supervisie lijken gerelateerd aan de effectiviteit van VIGT (Eikeseth, Hayward, Gale, Gitlesen, & Eldevik, 2009). Betere uitkomsten worden gerapporteerd voor kinderen met een hoger IQ, meer adaptief gedrag en een mindere mate van autisme bij de start van de behan-

deling (Ben-Itzhak & Zachor, 2007; Eldevik et al., 2010; Granpeesheh et al., 2009; Harris & Handleman, 2000; Remington, Hastings, Kovshoff, Degli Espinosa, Jahr, Brown, et al., 2007; Zachor & Ben-Itzhak, 2011).

Er komen diverse beperkingen in de implementatie van VIGT in de klinische setting naar voren. Zo starten kinderen de behandeling op latere leeftijd en een substantieel deel (16%) heeft een lager IQ dan in wetenschappelijke studies zoals die uitgevoerd door Lovaas (1987) en Sallows en Graupner (2005; Mudford, Martin, Eikeseth, & Bibby, 2001). Daarnaast rapporteren ouders belemmeringen in het implementeren van VIGT, waaronder problemen in het samenstellen en behouden van een gekwalificeerd behandelteam en een gebrek aan (financiële) middelen. Deze barrières leiden tot aangepaste – en mogelijk minder effectieve – programma's, waarin kinderen minder uren interventie ontvangen en waarbij de supervisie infrequent en van mindere kwaliteit is dan aanbevolen (Grindle, Kovshoff, Hastings, & Remington, 2009; Johnson & Hastings, 2002; Trudgeon & Carr, 2007).

Kortom, in de klinische praktijk is de implementatie van intensieve gedragstherapie gecompliceerd en daarom dient de effectiviteit van laag intensieve gedragstherapie (LIGT) en de condities waaronder significante vooruitgang wordt gevonden nader te worden onderzocht. Aangezien wetenschappelijke studies met betrekking tot LIGT zeer schaars zijn (zie voor een uitzondering: Eldevik, Eldevik, Eikeseth, Jahr & Smith, 2006) en er geen studies naar de effectiviteit van veelomvattende gedragstherapeutische programma's in Ne-

derland bestonden, voerden Peters-Scheffer, Didden, Mulders en Korzilius (2010) een eerste studie uit waarin twaalf kinderen gemiddeld 6.5 uur gedragstherapie per week als aanvulling op de behandeling op het kinderdagcentrum ontvingen. Na acht maanden behandeling lieten kinderen met VIGT hogere ontwikkelingsleeftijden en meer vooruitgang in zelfredzaamheid zien dan kinderen die de reguliere behandeling kregen. Geen significante verschillen werden gevonden met betrekking tot de ernst van autistische kenmerken en emotionele en gedragsproblemen.

Tekortkomingen van de studie waren de relatief kleine steekproefgrootte van de experimentele groep, de beperkte testbatterij en de relatief korte behandelperiode. Eveneens werden er geen data verzameld met betrekking tot de betrouwbaarheid (integriteit) van behandeling. De huidige studie is uitgevoerd om de effectiviteit van LIGT te onderzoeken bij 40 kinderen met ASS en een VB. In beide groepen bezochten de kinderen kinderdagcentra of scholen voor kinderen met een VB. De kinderen in de behandelgroep ontvingen daarnaast vier tot tien uur LIGT per week. Over een periode van twee jaar werden gestandaardiseerde metingen gedaan naar de ontwikkelingsleeftijd, het adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel, taalontwikkeling, ernst van autisme, vroege sociale communicatie, opvoedingsstress, gedragsflexibiliteit en emotionele en gedragsproblemen. Ook werden gegevens verzameld over het gedragstherapeutisch programma en de betrouwbaarheid van behandeling. Daarmee beoogt de studie het effect te bepalen van het toevoegen van maximaal 10

uur LIGHT aan het reguliere programma geboden op het kinderdagcentrum of de school op een brede range behandeluitkomsten van kinderen met ASS en een VB. Binnen het behandelmodel ontwikkeld door Driestroom (Elst) wordt de behandeling uitgevoerd door ambulante therapeuten en de groepsleiders of leerkrachten. Ouders, groepsleiders en leerkrachten worden getraind in gedragstherapeutische technieken en zijn verantwoordelijk voor de generalisatie van de aangeleerde vaardigheden naar de dagelijkse omgeving van het kind.

2 Methode

2.1 Participanten en setting

Veertig kinderen tussen de 3;1 en 7;10 jaar ($M = 62.52$ maanden; $SD = 16.96$) namen deel aan de studie. Door een clinicus (onafhankelijk van de studie) werden alle participanten op basis van de DSM-IV of ICD-10 criteria gediagnosticeerd met een VB en autistische stoornis of een pervasieve ontwikkelingsstoornis niet anders omschreven (PDD-NOS). Deze diagnose werd bij alle kinderen bevestigd door de Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS; Lord, Rutter, DiLavore, & Risi, 2006), de Childhood Autism Rating Scale (CARS; Schopler, Reichler, & Rochen Renner, 2007), de Mullen Scales of Early Learning (MSEL; Mullen, 1995) en de Vineland Adaptive Behavior Scales (VABS; Sparrow, Balla, & Cicchetti, 1984) afgenomen door de eerste auteur. Er werden geen aanvullende medische diagnoses, zoals ernstige epilepsie of visuele problematiek, gerapporteerd.

De 20 kinderen (18 jongens; 18 autisme, 2 PDD-NOS) binnen de behandelgroep werden

geworven met behulp van brieven verspreid door Driestroom (Elst, Nederland), een instelling die ondermeer LIGHT biedt aan kinderen met ASS en een VB. Ouders van 27 kinderen gaven schriftelijk hun toestemming en 20 kinderen werden in deze studie geïncludeerd. Exclusie vond plaats op basis van het annuleren van de financiering van de behandeling binnen 3 maanden na de start ($n = 2$) of door een gebrek aan samenwerking met de school die het kind bezocht ($n = 1$). Eén kind werd uitgesloten omdat hij niet voldeed aan de criteria voor ASS op de ADOS en de CARS en drie anderen werden geëxcludeerd omdat er na 24 maanden geen follow-up data verzameld konden worden omdat de ouders naar het buitenland verhuisden ($n = 1$) of niet bereikbaar waren ($n = 2$). Op basis van de scores op de Wing Subgroups Questionnaire (WSQ; Castelloe & Dawson, 1993) zijn 19 kinderen geclassificeerd met het afzijdige subtype en één kind met het passieve subtype.

Een stagiaire orthopedagogiek selecteerde uit een databestand van een longitudinale studie waaraan 100 kinderen met ASS en VB deelnamen (zie: Peters-Scheffer, Didden, & Korzilius, 2012; Peters-Scheffer, Didden, Green, Sigafoos, & Korzilius, ingediend) 20 kinderen (18 mannelijk; 19 autisme; 1 PDD-NOS) voor de controlegroep. Deze kinderen ontvingen de reguliere behandeling op een kinderdagcentrum of school voor kinderen met een VB. De stagiaire was niet op de hoogte van het exacte doel van de studie en de follow-up data van de kinderen. De participanten uit de controlegroep werden over dezelfde periode gevolgd als de kinderen uit

de behandelgroep (periode 2007-2011). Ieder kind uit de behandelgroep werd gekoppeld aan een kind uit de controlegroep op basis van de volgende variabelen: kalenderleeftijd (binnen 6 maanden, gemiddeld verschil = -1.25; $SD = 4.03$), diagnose (autisme versus PDD-NOS) en IQ ratio (gemiddeld verschil = 2.70; $SD = 5.58$) vastgesteld als de gemiddelde ontwikkelingsleeftijd op de subschalen van de MSEL gedeeld door de kalenderleeftijd en vermenigvuldigd met 100 (Mullen, 1995). Ouders van de kinderen uit de controlegroep waren niet actief op zoek naar gedragstherapie en alle kinderen gingen naar het kinderdagcentrum en scholen voor kinderen met een VB. Veertien kinderen hadden het afzijdige subtype, vier het passieve subtype en twee het actief-maar-bizarre subtype.

Bij de start van de behandeling lieten *t*-testen geen significante verschillen zien tussen de groepen op kalenderleeftijd ($t(38) = 0.14, p = .89$), ontwikkelingsleeftijd ($t(38) = 0.04, p = .97$), ratio IQ ($t(38) = 0.09, p = .93$), adaptief gedrag ($t(37) = 0.86, p = .39$), emotionele en gedragsproblemen ($t(34) = .11, p = .91$), receptieve taal ($t(38) = 0.24, p = .81$), expressieve taal ($t(38) = 0.33, p = .74$), gedragsflexibiliteit ($t(34) = 0.19, p = .85$), opvoedingsstress ($t(32) = 1.15, p = .26$), en scores op de ADOS ($t(38) = 1.63, p = .11$) en de CARS ($t(36) = 1.76, p = .08$). Tabel 1 toont de gegevens van de behandel- en controle groep.

2.2 Metingen

Instrumenten zijn gestandaardiseerde instrumenten ontwikkeld om een brede range van vaardigheden en gedragingen in zowel typisch

als atypisch ontwikkelende kinderen te meten. Instrumenten zijn afgenomen in een prikkelarme omgeving op het kinderdagcentrum of de school van het kind. Daarnaast nam de eerste auteur ten tijde van de basislijn en na 12 en 24 maanden behandeling de VABS en CARS bij de ouders af. Een week voor dit gesprek vulden de ouders de Child Behavior Checklist (CBCL; Achenbach & Rescorla, 2000), de Behavioral Flexibility Rating Scale - revised (BFRS-r; Green et al., 2007; Peters-Scheffer et al., 2008) en de Nijmeegse Ouderlijke Stress Index in (NOSI-K; De Brock, Vermulst, Gerris & Abidin, 1992).

Ontwikkelingsleeftijd

De Mullen Scales of Early Learning (MSEL; Mullen, 1995) is een gestandaardiseerde ontwikkelingstest voor kinderen vanaf de geboorte tot 68 maanden oud en bevat 5 subschalen: grove motoriek, fijne motoriek, visuele perceptie, receptieve taal en expressieve taal. De laatste vier schalen zijn afgenomen. Door de kalenderleeftijd van de kinderen konden niet alle gestandaardiseerde scores berekend worden. Daarom werden ontwikkelingsleeftijden en ratio IQ gebruikt in de analyses. Ratio IQ werd berekend door het gemiddelde leeftijdsequivalent op de vier subschalen te delen door de kalenderleeftijd van het kind en dit te vermenigvuldigen met 100.

Adaptief gedrag

De Vineland Adaptive Behavior Scales (VABS; Sparrow et al., 1984; Nederlandse versie door De Bildt & Kraijer, 2003) is een semi-gestructureerd ouderinterview dat adaptief gedrag

meet. De VABS leidt tot standaardscores en ontwikkelingsleeftijden op drie domeinen: communicatie, dagelijkse vaardigheden en socialisatie. Gebaseerd op deze scores kan eveneens een totaal score worden berekend. In de analyses zijn leeftijdsequivalenten in maanden gebruikt.

Sociaal-emotionele ontwikkeling

De Vineland Social-Emotional Early Childhood Scales (SEEC) is een semi-gestructureerd interview dat bij ouders wordt afgenomen om de sociaal-emotionele ontwikkeling van kinderen van nul tot zes jaar te meten en geeft een ontwikkelingsleeftijd op drie gebieden: interpersoonlijke relaties, spel en vrije tijd en coping (Sparrow, Balla, & Cicchetti, 1998). Leeftijdsequivalenten in maanden werden in de analyses gebruikt.

Subtype, symptomen en ernst van ASS

Het Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) is een semi-gestructureerd gestandaardiseerd observatie-instrument dat kenmerken van autisme op het gebied van communicatie, sociale interactie, spel en stereotiep gedrag meet. De ADOS bestaat uit vier modules, waarvan er slechts één wordt afgenomen (Lord et al., 2006). De Childhood Autism Rating Scale (CARS; Schopler et al., 2007) is een gedragsvragenlijst bestaande uit 15 items die ontwikkeld is om kinderen met ASS te onderscheiden van kinderen met een ontwikkelingsstoornis zonder ASS. De CARS werd ingevuld door de eerste auteur gebaseerd op haar observatie van het kind en een interview met ouders. De totale score classificeert

het kind als niet-autistisch (15-29.5), mild tot matig autistisch (30-36.5) en ernstig autistisch (37-60). De Wing Subgroups Questionnaire (WSQ; Castelloe & Dawson, 1993) is een vragenlijst met 13 domeinen (o.a. communicatie, sociale benadering, spel, imitatie, motoriek, weerstand tegen verandering) waarop ouders op elk domein het gedrag van hun kind op een schaal van nul tot zes scoren. Voor ieder subtype wordt een totaalscore berekend en het subtype met de hoogste score wordt gezien als representatief voor het subtype van het kind.

Vroege sociale communicatie en taal

De Early Social Communication Scales (ESCS; Mundy et al., 2003) vormen een semi-gestructureerd observatie-instrument om te meten hoe kinderen taken initiëren en reageren op taken gerelateerd aan joint attention, verzoeken en sociale interacties. Aantrekkelijk speelgoed en activiteiten worden gebruikt om sociaal en communicatief gedrag uit te lokken (Mundy et al., 2003). De eerste auteur nam de ESCS volgens de handleiding af, waarna de video-opname door één van de vijf observatoren gescoord werd. Deze observatoren waren niet op de hoogte van de groepsstatus (behandelgroep of controlegroep), de andere scores van de participant en het exacte doel van de studie. Om de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid vast te stellen werd ongeveer 20% van de videobeelden (van zowel de basislijn en de follow-upmetingen) door een tweede observator gescoord. Op de zes subschalen was de gemiddelde intraclass correlatie tussen de gepaarde metingen .62, hetgeen op een goede betrouwbaarheid duidt (Cicchetti, 1994).

Tabel 1: Gemiddelden (SD) van de behandelgroep en de controlegroep ten tijde van de basislijn en de eerste en de twee follow-upmeting gerapporteerd voor cognitief functioneren, zelfredzaamheid, sociaal emotionele ontwikkeling, vroege sociale communicatie, taal, ernst van autisme, emotionele en gedragsproblemen, gedragsflexibiliteit en opvoedingsstress. Noot. N = 40; met uitzondering van ^a n = 38, ^b n = 34; ^c n = 32; ^d n = 28; ^e n = 26.

Variabele	Basislijn		Na 12 maanden		Na 24 maanden	
	Behandelgroep	Controlegroep	Behandelgroep	Controlegroep	Behandelgroep	Controlegroep
<i>Cognitief functioneren</i>						
Ontwikkelingsleeftijd	23.34 (7.32)	23.43 (6.34)	33.76 (8.57)	27.58 (8.87)	39.70 (11.99)	32.44 (11.55)
Ratio IQ	40.66 (20.07)	40.14 (18.27)	48.17 (19.31)	39.26 (18.85)	48.12 (19.71)	39.42 (19.89)
Visuele receptie	26.30 (8.47)	26.95 (5.46)	36.70 (9.19)	31.65 (8.16)	44.50 (14.39)	36.10 (11.99)
Fijne motoriek	27.50 (6.20)	27.65 (6.43)	37.05 (9.68)	30.00 (8.37)	44.45 (14.66)	34.65 (10.37)
Receptieve taal	19.75 (9.26)	20.15 (8.57)	32.85 (11.88)	25.35 (11.28)	36.55 (11.63)	30.80 (13.27)
Expressieve taal	19.80 (8.32)	18.95 (9.12)	28.45 (10.72)	23.30 (11.43)	33.30 (12.02)	28.20 (14.03)
<i>Zelfredzaamheid^b</i>						
Totaal	18.35 (3.41)	19..82 (4.71)	29.82 (9.89)	22.94 (5.39)	37.35 (13.05)	26.71 (9.84)
Communicatie	23.94 (7.64)	24.35 (9.80)	36.53(13.78)	28.59 (10.40)	43.71 (17.68)	32.35 (14.56)
Dagelijkse vaardigheden	20.82 (6.12)	23.00 (9.26)	32.53 (9.31)	26.65 (9.72)	39.29 (11.13)	29.71 (12.15)
Socialisatie	19.76 (3.36)	22.88 (5.79)	32.47 (9.63)	26.47 (6.57)	39.35 (10.58)	29.71 (9.99)
<i>Sociaal emotionele ontwikkeling^c</i>						
Interpersoonlijke relaties	14.44 (5.19)	16.94 (6.50)	23.88 (6.47)	20.75 (5.74)	29.25 (9.60)	22.31 (6.59)
Spel en vrije tijd	15.38 (5.82)	18.75 (5.87)	28.44 (8.02)	22.81 (5.34)	36.19 (12.97)	25.31 (7.58)
<i>Vroege sociale communicatie</i>						
Initiëren van joint attention	7.43 (6.02)	7.64 (9.52)	7.21 (6.70)	5.71 (5.51)	11.50 (7.62)	11.21 (7.75)
Reageren op joint attention	96.60 (62.68)	118.80 (58.92)	101.81 (68.50)	121.73 (79.74)	84.70 (73.19)	95.31 (83.88)
Initiëren van verzoeken	24.64 (4.77)	25.71 (4.50)	26.29 (7.49)	24.71 (5.73)	26.36 (5.21)	26.86 (4.75)
Reageren op verzoeken	69.16 (35.05)	70.07 (22.53)	84.56 (19.38)	81.31 (20.39)	88.21 (17.60)	89.33 (15.90)
Initiëren van sociale interactie	3.21 (1.48)	2.07 (1.49)	3.07 (1.54)	3.57(1.74)	3.79 (2.36)	3.29 (2.02)
Reageren op sociale interactie	7.50 (2.74)	7.00 (2.91)	9.14 (3.63)	7.36 (3.23)	9.79 (3.98)	9.07 (3.45)
<i>Taal</i>						
Receptieve taal	25.00 (4.48)	24.70 (3.21)	30.35 (7.87)	27.10 (5.35)	34.30 (10.54)	29.30 (7.42)
Expressieve taal	18.35 (6.72)	17.65 (6.64)	27.45 (9.89)	21.80 (9.83)	34.15 (14.54)	30.80 (15.12)
<i>Autisme</i>						
Totaal (ADOS)	17.00 (3.28)	15.45 (2.72)			12.05 (5.41)	15.15 (4.26)
Communicatie (ADOS)	6.70 (1.84)	5.85 (1.23)			4.60 (2.58)	5.95 (2.01)
Sociale interactie (ADOS)	10.05 (2.21)	9.90 (2.61)			7.20 (3.29)	9.65 (2.46)
Ernst van symptomen (CARS) ^a	43.84 (4.30)	40.79 (6.20)	37.21 (3.95)	40.11 (5.65)	34.89 (3.62)	39.95 (4.62)
<i>Emotionele/ gedragsproblemen^d</i>						
Totaal	67.00 (26.38)	68.29 (33.47)	63.50 (21.31)	60.43 (26.92)	52.86 (23.52)	65.21 (32.62)
Internaliserend	21.36 (9.88)	21.93 (11.71)	21.43 (7.46)	19.57 (8.61)	17.86 (7.66)	21.43 (11.53)
Externaliserend	22.43 (9.39)	23.50 (12.51)	22.43 (9.39)	21.43 (11.13)	18.36 (9.96)	22.14 (11.46)
<i>Gedragsflexibiliteit^d</i>						
Totaal	10.00 (6.96)	11.29 (6.64)	9.86 (6.60)	10.36 (6.37)	9.14 (4.59)	11.14 (6.49)
Objecten	7.43 (4.97)	8.07 (4.84)	6.93 (4.53)	7.36 (4.58)	6.43 (3.57)	7.93 (4.53)
Omgeving	1.86 (2.14)	2.43 (2.10)	2.29 (1.82)	2.29 (1.94)	1.93 (1.21)	2.50 (2.31)
Personen	0.71 (0.91)	0.79 (1.05)	0.64 (0.93)	0.71 (1.07)	0.79 (0.89)	0.71 (0.99)
Opvoedingsstress ^e	78.38 (28.75)	95.08 (30.31)	80.85 (32.68)	83.00 (26.78)	71.38 (30.76)	87.08 (31.43)

Receptieve taal werd gemeten met de Peabody Picture Vocabulary Test (PPVT; Dunn & Dunn, 1997), terwijl expressieve taal werd gemeten met de woordenschat test van de Schlichting Test voor Taalproductie (Schlichting, van Eldik, Lutje Spelberg, van der Meulen, & van der Meulen, 1995). In de analyses zijn leeftijdsequivalenten in maanden gebruikt.

Emotionele en gedragsproblemen

De Nederlandse versie van de Child Behavior Checklist voor de leeftijd van 1.5 tot 5 jaar (CBCL; Achenbach & Rescorla, 2000) werd door één van de ouders ingevuld om de emotionele en gedragsproblemen gedurende de afgelopen 3 maanden van hun kind te meten. Scores op een drie-puntsschaal van 99 items op emotionele en gedragsproblemen resulteren in scores voor zeven gedragscategorieën: emotioneel-reactief gedrag, angst/depressie, somatische klachten, teruggetrokken gedag, slaapproblemen, aandachtsproblemen, en agressief gedrag. Somscores werden berekend op internaliserende, externaliserende en totale schaal en hogere scores verwijzen naar meer emotionele en gedragsproblemen.

Gedragsflexibiliteit

De Nederlandse versie van de gereviseerde Behavior Flexibility Rating Scale (BFRS-R; Green et al., 2007) werd gebruikt om de mate van gedragsflexibiliteit te bepalen. Eén van de ouders vulde op 16 items een drie-puntsschaal in waarbij de items verwijzen naar specifieke en onverwachte gebeurtenissen en veranderde routines die mogelijk problematisch voor kinderen met ASS zijn. De schaal bestaat uit

een totale schaal en drie subschalen: flexibiliteit ten opzichte van objecten, flexibiliteit ten opzichte van de omgeving en flexibiliteit ten opzichte van personen. Psychometrische kenmerken (interne consistentie en intrabeoordelaars- en interbeoordelaarsbetrouwbaarheid) van de Nederlandse versie zijn goed tot excellent (Peters-Scheffer et al., 2008). Hogere scores op de BFRS-r vertegenwoordigen meer problemen met betrekking tot gedragsflexibiliteit.

Opvoedingsstress

Om opvoedingsstress te meten vulden de moeders de verkorte versie van de Nijmeegse Ouderlijke Stress Index in (NOSI-k; De Brock et al., 1992). Vijfentwintig items gerelateerd aan opvoedingsstress werden gescoord op een zes-puntsschaal resulterend in een totaalscore. Hogere scores vertegenwoordigen meer opvoedingsstress.

Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid

Ten tijde van de basislijn en na 12 en 24 maanden behandeling werden de kinderen door de eerste auteur gezien. Voor 57 metingen werden betrouwbaarheidsdata voor de MSEL verkregen doordat een tweede observator onafhankelijk van de studie videobeelden van deze afnames analyseerde. De observator was niet op de hoogte van het exacte doel van de studie, de scores van de eerste observator en of de participanten die tot de behandel- of controlegroep behoorden. De intraclasscorrelatie tussen beide observatoren was .99 (enkele meting), hetgeen duidt op een excellente betrouwbaarheid. Daarnaast werd de

interbeoordelaarsbetrouwbaarheid berekend over 24% van de metingen op de totale schaal van de VABS, 18% van de CARS, 29% van de CBCL, 31% van de NOSI-K en 29% van de BFRS-R. Intraclass correlaties waren respectievelijk .99, .95, .97, .99 en .99, duidend op excellente betrouwbaarheid.

In 50% van de metingen tijdens de basislijn of de tweede follow-up werd op basis van een interview met de persoonlijk begeleider of leerkracht van het kind een tweede VABS ingevuld ($n = 32$). De intraclasscorrelatie van .96 tussen de afname bij de ouders en de persoonlijk begeleider of leerkrachten duidt op een excellente interbeoordelaarsbetrouwbaarheid en een minimale bias van de ouders (Cicchetti, 1994).

2.3 Behandeling

Behandeling van beide groepen vond plaats op kinderdagcentra en scholen voor kinderen met een VB. Deze voorzieningen waren open van 8.30 tot 15.30 uur, van maandag tot vrijdag. Klassen bestonden uit 6 tot 12 kinderen met een vergelijkbaar ontwikkelingsniveau en beperkingen en twee tot drie begeleiders. Gedurende individuele behandelsessies werkte het kind alleen met zijn of haar therapeut in een aparte ruimte. Wanneer het kind niet deelnam aan een van deze sessies, nam het samen met andere kinderen deel aan het groepsprogramma in de klas.

2.3.1 De behandelgroep

De behandelgroep ontving vier tot tien uur één-op-één interventie per week over een periode van twee jaar. De behandelprocedure en

het curriculum waren gebaseerd op Lovaas (Leaf & McEachin, 1999; Lovaas, 2003). Leertheoretische principes (ABA; o.a. systematische bekrachtiging, stimulus controle, discrete trial teaching, taakanalyse, chaining, generalisatie, functionele gedragsanalyse) werden gebruikt en de behandeling ontwikkelde geleidelijk en systematisch van relatief eenvoudige taken naar meer complexe taken (Leaf & McEachin, 1999; Hayward, Gale, & Eikeseth, 2009; Lovaas, 2003). Er werden geen aversieve stimuli toegepast. Behandeling werd geïmplementeerd in de natuurlijke omgeving van het kind (o.a. thuis, directe omgeving, kinderdagcentrum, school) om de kans te vergroten dat het kind de geleerde vaardigheden gaat toepassen in de dagelijkse situatie (Lovaas, 1993).

Elk kind had een individueel leerplan (ILP) gebaseerd op voortdurende monitoring van de vooruitgang en de problematiek van het kind en een logboek met beschrijvingen van de programma's en rapportages van de vooruitgang per sessie. Deze programmaomschrijvingen bevatten informatie over het doelgedrag, instructieprocedures, materialen, verwachte of gewenste gedragingen van het kind, criteria voor het beheersen van de vaardigheid en het volgende programma dat geleerd moet worden. Tijdens iedere behandelsessie vult de therapeut een gedetailleerd formulier in het logboek in, die informatie biedt over de behandeling (therapeut, datum, duur), het aantal correcte trials (oefeningen), doelgedragingen, vooruitgang van het kind en de volgende stap die aangeleerd moet worden.

Ieder kind kreeg een gedragskundig medewerker en drie tot zeven therapeuten toegewezen. Gemiddeld ontvingen kinderen 4.98 uren één-op-één behandeling per week ($SD = 1.45$; range = 1.32 – 7.11)¹. Tot de voornaamste taken van de gedragskundig medewerkers behoren de supervisie van de (senior) therapeuten, besprekingen met het behandelteam, ouders, het team van de school of het kinderdagcentrum en overige professionals betrokken bij het kind. De gedragskundig medewerker vervult ook enkele administratieve taken gerelateerd aan de behandeling, zoals het invullen van de leerlijnen, het schrijven van programma's en het uitvoeren van taakanalyses en functionele analyse ten behoeve van probleemgedrag. Daarnaast voert de gedragskundig medewerker diverse één-op-één sessies met het kind uit. Een behandelcoördinator met uitgebreide ervaring met ABA, ASS en VB was beschikbaar voor consultatie. Gemiddeld besteedden de behandelcoördinator en de gedragskundig medewerker 4.39 uur per week per kind.

Therapeuten hadden een parttime aanstelling, terwijl zij onderwijs volgden aan het hoger beroepsonderwijs (Sociale Pedagogische Hulpverlening en Pedagogiek) of de universiteit (Psychologie of Orthopedagogiek) of als groepsleider of leerkracht op het kinderdagcentrum of de school werkten. De therapeuten kregen een training in leertheoretische principes en werkten onder supervisie van de programmaconsultants. Tijdens de training ontvingen de therapeuten verbale en geschreven

informatie over ABA, ASS, VB en de trainingsprocedures. Om vaardigheden te oefenen werden rollenspellen gebruikt. Na de training observeerden de therapeuten enkele trainingen van meer ervaren therapeuten, waarbij zij zelf steeds meer van de behandeling overnamen. Voordat de therapeut zelfstandig ging trainen diende de gedragskundig medewerker vast te stellen dat de nieuwe therapeut de behandeling met voldoende kwaliteit en nauwkeurigheid uitvoerde. De gemiddelde procedurele betrouwbaarheid van de behandeling was 90.3% op het instrument ontwikkeld voor dit programma (zie voor meer informatie 2.3.3.).

Gedurende halfmaandelijks besprekingen, waarbij therapeuten, leerkrachten, groepsleiders en ouders aanwezig zijn, werden de vooruitgang van het kind en de huidige en toekomstige programma's besproken en werden aanvullende ABA principes aangeleerd. Ook kregen ouders en professionals specifieke richtlijnen om nieuw aangeleerde vaardigheden te generaliseren en over de tijd te behouden en werden zij getraind en gestimuleerd om ABA strategieën gedurende dagelijkse activiteiten te gebruiken. Aan de hand van video-opnames werd feedback op de trainersvaardigheden gegeven.

Zoals aanbevolen door Lechargo and Carr (2008) laat Tabel 2 de belangrijkste kenmerken van het curriculum van iedere participant zien. Per ontwikkelingsdomein is een leerlijn ontwikkeld waarin de leerdoelen voor het betreffende domein zijn opgenomen. Deze volgen de normale ontwikkeling en per kind

1 Gerapporteerde behandeluren zijn de uren waarin het kind daadwerkelijk behandeld is rekeninghoudend met de uren dat het kind afwezig was door persoonlijke omstandigheden als ziekte en vakantie. Op verzoek van de ouders en het kinderdagcentrum werden de uren voor één kind opzettelijk laag gehouden.

wordt op basis van observatie en diagnostiek vastgesteld aan welke doelen gewerkt wordt. Dit zijn meerdere doelen op verschillende domeinen tegelijkertijd. Hoewel de domeinen en de technieken waarmee vaardigheden aangeleerd worden grotendeels overeenkomen, zullen de individuele leerdoelen, en daarmee de behandeluitkomsten, tussen de kinderen variëren. Door een gebrek aan medewerking van vervolgvoorzieningen of problemen met het verkrijgen van financiering ontvingen negen kinderen niet de volledige twee jaar behandeling. Hoewel na één jaar één kind wisselde van instelling, ontvingen de overige kinderen ongeveer twee jaar LIGT.

2.3.2 De controlegroep

Ouders gaven de eerste auteur informatie over de behandeling van de controlegroep. Gedurende een kort interview met de leerkracht of de persoonlijk begeleider van het kind werd deze informatie gecontroleerd. Kinderen in de controlegroep ontvingen de reguliere zorg voor kinderen met ASS en een VB op een kinderdagcentrum of school voor kinderen met een VB. Meestal waren de omgeving en de taken gestructureerd zoals bijvoorbeeld omschreven in de TEACCH methode (Schopler, Mesibov, & Baker, 1982). Behandeling bestond uit een mix van interventies, waaronder elementen van TEACCH, Picture Exchange

Tabel 2: Overzicht van programma's van de kinderen in de behandelgroep																		
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16	17	18
Gehoorzaamheid, aandacht en non-verbale communicatie	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□
Fijne motoriek	□				□	□	□			□		□	□	□		□	□	
Grove motoriek	□				□	□				□								
Zelfredzaamheid			□	□	□	□	□			□	□	□	□	□	□		□	□
Receptieve taal	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□
Expressieve taal	□	□	□	□		□				□	□		□	□	□	□	□	
PECS	□			□	□	□	□			□	□	□	□		□	□	□	□
(voor) schoolse vaardigheden			□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	
Imitatie	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□
Matchen en categoriseren	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	□	
Spel	□	□			□	□	□		□	□		□	□	□	□	□	□	
Sociale interactie en communicatie			□	□	□		□			□	□		□				□	□
Emoties: benoemen en imitatie	□	□				□						□						□
Geheugen											□	□		□				

Noot: Door computerproblemen, waren de individuele leerplannen van twee kinderen niet beschikbaar

Communication System (PECS; Bondy & Frost, 2002), individuele logopedie en sensorische integratie therapie. Het programma van ieder kind bestond uit individuele doelen op het gebied van taal, spel, sociale vaardigheden, emoties, motoriek, (voor)schoolse vaardigheden en zelfredzaamheid. Behandeling was gebaseerd op de kindkenmerken en de expertise en voorkeuren van het behandelteam. Een klinisch psycholoog of orthopedagoog bood informatie en ondersteuning aan ouders en professionals.

2.3.3 Betrouwbaarheid van de behandeling

In de behandelgroep zijn diverse maatregelen genomen om de betrouwbaarheid en kwaliteit van behandeling te bewaken. Ieder kind had een eigen behandelplan, waarin een taak-analyse van ieder doelgedrag, criteria en aanleerprocedures tot in detail beschreven zijn. Daarnaast is de behandeling beschreven in een handleiding en algemene programma's. Alle therapeuten zijn getraind in de trainingstechnieken behorend bij de behandeling en doelgedragingen en procedures werden in detail uitgelegd en geoefend gedurende de halfmaandelijke vergaderingen. Behandelsessies werden opgenomen en videobeelden werden door de gedragskundig medewerker geanalyseerd. Door feedback naar aanleiding van video-opnames en tijdens behandelsessies werd zorg gedragen voor een behandeling van hoge kwaliteit, die geïmplementeerd werd zoals omschreven in het behandelplan van het kind. Procedurele betrouwbaarheid werd vastgesteld door drie observatoren onafhankelijk van de behandeling en de studie en gebruik-

makend van een observatie-instrument ontwikkeld door de eerste auteur, drie gedragskundig medewerkers en de behandelcoördinator van het project (zie voor meer informatie: Peters-Scheffer, Didden, Korzilius, & Sturmey, ingediend voor publicatie). Gebruikmakend van event recording, scoorde de observator of de DTT componenten correct of incorrect geïmplementeerd werden (ondermeer discriminatieve stimulus, prompt, responsetijd, feedback, error-correctie, positieve oefentrial en de intertrialinterval). Voor elk videofragment werd het percentage correct geïmplementeerde componenten en trials berekend. De drie observatoren concludeerden dat er in iedere sessie sprake was van DTT en dat de procedurele betrouwbaarheid 90.3% was.

3 Resultaten

3.1 Statistische significantie

Ontwikkelingsleeftijd en IQ

Om de verschillen tussen de behandelgroep en de controlegroep op ontwikkelingsleeftijd en IQ te toetsen zijn er twee ANOVA's met herhaalde metingen voor ontwikkelingsleeftijd of IQ over tijd uitgevoerd. Aangezien voor ontwikkelingsleeftijd en IQ, Mauchly's test aangaf dat de varianties voor beide groepen niet gelijk waren ($\chi^2(2) = .51$; $p < .001$ voor ontwikkelingsleeftijd; $\chi^2(2) = .74$; $p < .01$ voor IQ) werden vrijheidsgraden gecorrigeerd door gebruik te maken van Greenhouse-Geisser ($\epsilon = .67$ voor ontwikkelingsleeftijd; $\epsilon = .79$ voor IQ).

Hoewel in zowel de behandelgroep als de controlegroep de ontwikkelingsleeftijd over tijd steeg ($F(1.35, 51.10) = 113.60$, $p < .001$), is deze toename significant groter in de behan-

delgroep ($F(1.35, 51.10) = 11.04, p = .001$). In beide groepen zijn metingen tussen de basislijn en de eerste follow-up meting ($F(1, 19) = 113.06, p < .001$ voor de behandelgroep; $F(1, 19) = 18.08, p < .001$ voor de controlegroep) en tussen de eerste en tweede follow-up meting ($F(1, 19) = 33.57, p < .001$ voor de behandelgroep; $F(1, 19) = 18.00, p < .001$ voor de controlegroep) significant. Voor beide groepen laten MANOVA's en ANOVA's met herhaalde metingen een significante stijging van de ontwikkelingsleeftijd op de subschalen van de MSEL zien. Herhaalde contrasten laten zien dat alleen de vooruitgang van de controlegroep op fijne motoriek tussen de basislijn en de eerste follow-up meting niet significant was ($F(1, 19) = 3.72, p = .07$).

Eveneens is er een significant effect van de behandeling op IQ ($\epsilon = .79; F(1.59, 60.36) = 13.70, p < .001$). ANOVA's uitgevoerd voor de afzonderlijke groepen laten een significante stijging van het IQ in de behandelgroep ($F(2, 38) = 20.35; p < .001$), maar niet in de controlegroep zien ($F(1.53, 29.16) = 0.29, p = .69$). In de behandelgroep stijgt het IQ tussen de basislijnmeting en de eerste follow-upmeting ($F(1, 19) = 33.85, p < .001$), maar blijft het IQ relatief stabiel tussen de follow-upmetingen na 12 en 24 maanden ($F(1, 19) = .002, p = .97$). Beschrijvende statistieken worden weergegeven in Tabel 1.

Zelfredzaamheid

Een ANOVA met herhaalde metingen (Greenhouse-Geisser: $\epsilon = .70$) is uitgevoerd om verschillen tussen de behandelgroep en controlegroep over tijd op zelfredzaamheid te

toetsen. Als verwacht laten beide groepen een significante toename in zelfredzaamheid, zoals gemeten op de totale schaal van de VABS, zien ($F(1.40, 44.70) = 59.47, p < .001$). In de behandelgroep zijn deze verschillen echter significant groter ($F(1.40, 44.70) = 13.58, p < .001$).

Aangezien de subschalen van de VABS (communicatie, dagelijkse vaardigheden en socialisatie) correleren ($r = .28$ tot $r = .85$), is een MANOVA met herhaalde metingen gebruikt om de verschillen tussen de groepen op de subschalen vast te stellen. Resultaten laten een verbetering over tijd op alle schalen en in beide groepen zien ($\Lambda = .23, F(6, 27) = 15.32, p < .001$); echter, de vooruitgang in de behandelgroep is significant groter ($\Lambda = .56, F(6, 27) = 3.52, p = .01$). ANOVA's met herhaalde metingen (Greenhouse-Geisser) laten significante interactie-effecten op alle domeinen zien (communicatie: $\epsilon = .75; F(1.49, 47.74) = 7.48, p < .004$), dagelijkse vaardigheden, $\epsilon = .74; F(1.48, 47.47) = 15.57, p < .001$), en socialisatie, $\epsilon = .85; F(1.70, 54.38) = 16.40, p < .001$), hetgeen wijst op een significant grotere vooruitgang in de behandelgroep (zie Tabel 1). Contrasten duiden bij beide groepen op een significante vooruitgang tussen de basislijn en de eerste follow-up en tussen de eerste en tweede follow-up.

Sociaal emotionele ontwikkeling

Aangezien de subschalen van de Vineland-SEEC (interpersoonlijke relaties en spelvaardigheden) gecorreleerd zijn ($r = .70$ tot $r = .87$), is een MANOVA met herhaalde metingen gebruikt om verschillen tussen groepen op de subschalen te analyseren. Hoewel in beide groepen sprake is van een significant effect

over tijd, ($\Lambda = .23$, $F(4, 27) = 22.69$, $p < .001$), is de vooruitgang van de behandelgroep significant groter dan de vooruitgang van de controlegroep ($\Lambda = .52$, $F(4, 27) = 6.15$, $p = .001$). ANOVA's met herhaalde metingen (Greenhouse-Geisser) van de afzonderlijke groepen laten eveneens significante interactie-effecten zien op interpersoonlijke relaties ($\epsilon = .64$; $F(1.29, 38.55) = 10.23$, $p = .001$) en spelvaardigheden ($\epsilon = .78$; $F(1.57, 46.96) = 17.17$, $p < .001$). In beide groepen duiden herhaalde contrasten op een significante vooruitgang over tijd over alle periodes op alle subschalen.

Taal en vroege sociale communicatie

Een ANOVA met herhaalde metingen laat een significant interactie-effect van receptieve taal over tijd zien ($F(2,76) = 3.35$, $p = .04$), hetgeen duidt op een significante grotere vooruitgang in de behandelgroep (zie Tabel 1). Herhaalde contrasten uitgevoerd voor beide groepen laten een significante vooruitgang zien tussen de basislijn en de eerste follow-upmetingen en tussen de eerste en de tweede follow-upmeting.

Hoewel expressieve taal in beide groepen over tijd verbeterde ($\epsilon = .70$; $F(1.40, 53.18) = 51.21$, $p < .001$), is er geen significant interactie-effect op expressieve taal gevonden ($F(1.40, 53.18) = 1.50$, $p = .23$). Herhaalde contrasten laten significante verschillen tussen de basislijn en de eerste follow-up meting en tussen de eerste en tweede follow-up voor beide groepen zien.

Uit een MANOVA met herhaalde metingen uitgevoerd met de subschalen van de ESCS (inititiëren van en reageren op joint attention, verzoeken en sociale interactie) blijkt een sig-

nificant effect over tijd ($\Lambda = .29$, $F(12, 15) = 3.08$, $p = .02$), al worden er geen significante verschillen tussen beide groepen zichtbaar ($\Lambda = .75$, $F(6, 21) = 1.16$, $p = .36$). ANOVA's met herhaalde metingen laten een significant effect over tijd op het initiëren van joint attention ($F(2, 52) = 8.08$, $p = .001$), het reageren op verzoeken (Greenhouse-Geisser: $\epsilon = .80$; $F(1.61, 41.75) = 10.05$, $p = .001$) en het reageren op sociale interactie ($F(2, 52) = 4.77$, $p = .01$), maar niet-significante effecten op het reageren op joint attention ($F(2, 52) = 1.17$, $p = .32$), initiëren van verzoeken ($F(2, 52) = 0.65$, $p = .53$) en het initiëren van sociale initiatieven ($F(2, 52) = 2.51$, $p = .09$) zien.

Subtype, symptomen en ernst van ASS

Uit een ANOVA met herhaalde metingen blijkt een significant interactie-effect tussen tijd en behandeling op de ernst van autisme, zoals gemeten op de CARS ($F(2, 72) = 18.20$; $p < .001$). Voor de afzonderlijke groepen laten ANOVA's met herhaalde metingen een significant effect over tijd zien voor de behandelgroep ($\epsilon = .77$; $F(1, 54, 27.65) = 55.77$, $p < .001$), maar niet voor de controlegroep ($F(2, 36) = 0.35$, $p = .71$). Herhaalde contrasten wijzen in de behandelgroep op een significante afname in de ernst van symptomen tussen de basislijn en de eerste meting ($F(1, 18) = 48.45$, $p < .001$) en tussen beide follow-up metingen ($F(1, 18) = 15.02$, $p = .001$).

Een ANOVA met herhaalde metingen (totale schaal ADOS) en een MANOVA met herhaalde metingen (subschalen communicatie en sociale interactie) laten een significant interactie effect op de totale schaal ($F(1, 38) = 12.54$, $p = .001$) en de subschalen ($\Lambda = .75$, $F(2,$

37) = 6.20, $p < .01$) zien. Met ANOVA's met herhaalde metingen uitgevoerd voor de afzonderlijke groepen wordt in de behandelgroep de significante afname over tijd gevonden voor zowel de communicatie ($F(1, 19) = 11.34$, $p < .01$) als de sociale interactie schaal ($F(1, 19) = 20.23$; $p < .001$), maar niet in de controlegroep (communicatie: $F(1, 19) = .07$, $p = .80$; sociale interactie: $F(1, 19) = 0.17$; $p = .69$).

Emotionele en gedragsproblemen

Een ANOVA met herhaalde metingen is gebruikt om verschillen tussen de behandel- en controlegroep op de totale schaal van de CBCL vast te stellen. Als verwacht veranderen de emotionele en gedragsproblemen over tijd ($F(2, 52) = 3.67$, $p = .03$). Daarnaast is er ook sprake van een marginaal significant interactie effect ($F(2, 52) = 3.03$, $p = .06$), duidend op een grotere afname in emotionele en gedragsproblemen in de behandelgroep.

Een ANOVA met herhaalde metingen voor de afzonderlijke groepen laat een significant effect over tijd zien in de behandelgroep ($F(2, 26) = 4.49$, $p = .02$), maar niet in de controlegroep ($F(2, 26) = 1.78$, $p = .19$). In de behandelgroep laten herhaalde contrasten significante verschillen zien tussen de eerste en de tweede follow-up ($F(1, 13) = 7.50$, $p = .02$), maar niet tussen de basislijn en de eerste follow-up meting ($F(1, 13) = 0.41$, $p = .53$).

Het marginaal significant effect werd niet bevestigd door een MANOVA met herhaalde metingen op de subschalen van de CBCL; er is geen effect over tijd ($\Lambda = .85$, $F(4, 23) = 1.05$, $p = .15$) noch van behandeling ($\Lambda = .84$, $F(4, 23) = 1.09$, $p = .16$).

Gedragsflexibiliteit

Om verschillen in gedragsflexibiliteit tussen de behandel- en de controlegroep vast te stellen is gebruik gemaakt van een ANOVA met herhaalde metingen met de totale score over tijd en een MANOVA met herhaalde metingen met de scores op subschalen van de BFRS-R over tijd. Geen significante verschillen in gedragsflexibiliteit over tijd zijn gevonden op de totale schaal, (Greenhouse-Geisser; $\epsilon = .81$; $F(1.62, 42.20) = 0.56$, $p = .66$), noch op de subschalen ($\Lambda = .85$, $F(6, 21) = .61$, $p = .72$).

Opvoedingsstress

Om verschillen in opvoedingsstress tussen de behandel- en controlegroep te meten, is een ANOVA met herhaalde metingen van opvoedingsstress over tijd gebruikt. Er is geen significant effect van tijd ($F(2, 48) = 1.51$, $p = .23$) en behandeling op opvoedingsstress zoals deze gerapporteerd zijn door moeders ($F(1, 24) = 1.16$, $p = .29$).

3.2 Klinische significantie

Betrouwbare en klinische verandering

Naast de groepseffecten werden de individuele veranderingen geanalyseerd door de betrouwbare verandering en klinische significantie te berekenen. Betrouwbare verandering werd vastgesteld door de *Reliable Change Index* (RCI; Jacobson & Truax, 1991) te berekenen met de volgende formule:

$$RCI = \frac{x_2 - x_1}{\sqrt{2 (s_1^2 + s_2^2 - 2 r_{xx} s_1 s_2)}}$$

x_1 en x_2 zijn de scores van de participant voor en na de behandeling, s_1 de standaarddeviatie van de score voor de behandeling en r_{xx} de interne consistentie van de test-hertestbetrouwbaarheid van het gebruikte instrument. Tabel 3 toont de standaardfout van het verschil en het percentage kinderen in de behandelgroep en de controlegroep dat een betrouwbare verandering liet zien.

Gewoonlijk wordt een behandeling als klinisch significant gezien als een persoon na de behandeling normaal kan functioneren (Jacobson, Roberts, Berns, & McGlinchey,

1999). Gezien de ernst van de VB van de participanten in de huidige studie lijkt dit criterium te strikt. Daarom is in deze studie klinische significantie berekend aan de hand van de volgende formule: $CSC = M_1 \pm (2 \times s_1)$. Hierbij is m_1 de gemiddelde score voor de behandeling en de s_1 standaardfout van de score voor de behandeling.

De minimale score voor klinisch significante verandering en het aantal kinderen dat dit in de behandelgroep en de controlegroep behaalt, zijn weergegeven in Tabel 3. Tabel 4 geeft een overzicht van het aantal kinderen

Tabel 3: Percentages kinderen die betrouwbare en klinisch significante verandering voor de behandelgroep en de controlegroep

Variabele	Betrouwbare verandering			Klinisch significant		
	SE_{diff}	BG	CG	KL	BG	CG
Ontwikkelingsleeftijd	2.87	100	60	> 36.89	50	30
Ratio IQ	8.04	15	0	> 78.29	10	5
Adaptief gedrag – totaal ^b	1.44	100	64.71	> 26.70	76.47	35.29
Interpersoonlijke relaties ^c	3.19	87.5	43.75	> 26.75	50	25
Spel en vrije tijd ^c	3.38	100	43.75	> 28.81	68.75	31.25
Initiëren van joint attention ^c	4.18	18.75	25	> 21.60	12.5	12.5
Reageren op joint attention ^c	31.12	18.75	12.5	> 221.64	0	0
Initiëren van verzoeken ^c	16.51	0	0	> 34.14	18.75	6.25
Reageren op verzoeken ^c	28.98	6.25	0	> 127.14	0	0
Initiëren van sociale interactie ^c	0.67	18.75	18.75	> 5.71	18.75	18.75
Reageren op sociale interactie ^c	1.46	62.50	37.5	> 12.79	18.75	18.75
Receptieve taal	1.20	85	50	> 32.56	50	25
Expressieve taal	3.36	70	70	> 31.20	55	40
ASS total (ADOS)	1.13	70	30	< 10.07	40	20
ASS ernst van symptomen (CARS) ^a	1.84	89.47	26.32	< 31.49	15.79	5.26
Emotionele en gedragsproblemen ^d	8.55	40	26.67	< 12.86	6.67	13.33
Gedragsflexibiliteit ^d	2.89	13.33	6.67	< -2.31	0	0
Opvoedingsstress ^c	8.89	38.46	30.77	< 29.80	7.69	15.38

Noot. N = 40; met uitzondering van ^a n = 38, ^b n = 34; ^c n = 32; ^d n = 30; ^e n = 26; BG = percentage personen dat betrouwbare verandering/ klinische significantie bereikt in de behandelgroep; CG = percentage personen dat betrouwbare verandering/ klinische significantie bereikt in de controlegroep; SE_{diff} = Standaardfout voor het verschil (m.a.w., indicatie van de spreiding van verschil scores als er geen effect optreedt); KL = Klinische level (minimum score voor het bereiken van klinische significantie). JA= Joint attention; SI = Sociale interactie.

met een betrouwbare en klinisch significante verandering, met betrouwbare, maar geen klinisch significante verandering, met klinisch significante, maar geen betrouwbare verandering en zonder betrouwbare en klinisch significante verandering. In de behandelgroep bereiken meer kinderen betrouwbare en klinisch significante veranderingen op ontwikkelingsleeftijd, zelfredzaamheid, interpersoonlijke relaties, spel en vrije tijd, receptieve taal, expressieve taal, ernst van autisme (ADOS en CARS) en het reageren op sociale interactie dan in de controlegroep. Echter, in de controlegroep

laten meer kinderen betrouwbare en klinisch significante veranderingen op de CBCL en opvoedingsstress zien. Het aantal kinderen die betrouwbare en klinisch significante veranderingen laten zien was gelijk tussen de groepen op ratio IQ, gedragsflexibiliteit, initiëren en reageren op joint attention en verzoeken en het initiëren van sociale interactie.

Diagnose ASS en VB na de behandeling

Eveneens zijn er data verzameld met betrekking tot de diagnose na beëindiging van de behandeling. Vijfenvoertig procent van de be-

Tabel 4: Frequenties van de kinderen in de behandel- en controlegroep die (1) een klinisch en betrouwbaar significante verandering, (2) een betrouwbare, maar niet klinisch significante verandering, (3) een klinisch significante, maar geen betrouwbare verandering, en (4) geen betrouwbare en klinisch significante verandering

Variabelen	Behandelgroep				Controlegroep			
	1	2	3	4	1	2	3	4
Ratio IQ	0	3	2	15	0	0	1	19
Ontwikkelingsleeftijd	10	10	0	0	6	6	0	8
Adaptief gedrag	13	4	0	0	5	6	1	5
Interpersoonlijke relaties	11	5	0	0	3	4	1	8
Spel en vrije tijd	11	5	0	0	0	7	3	6
Receptieve taal	10	7	0	3	5	5	0	10
Expressieve taal	11	3	0	6	8	6	0	6
ADOS totaal	7	7	1	5	3	3	1	13
CARS	3	14	0	2	1	4	0	14
CBCL total	0	6	1	8	1	3	1	10
Gedragsflexibiliteit	0	2	0	13	0	1	0	14
Opvoedingsstress	0	5	1	7	1	3	3	7
Initiëren van joint attention	1	2	1	12	1	3	1	11
Reageren op joint attention	0	3	0	13	0	2	0	14
Initiëren van verzoeken	0	0	3	13	0	0	1	15
Reageren op verzoeken	0	1	0	15	0	0	0	16
Initiëren van sociale interactie	3	6	0	7	3	3	0	10
Reageren op sociale interactie	3	7	0	6	1	5	2	8

handelgroep (8 autisme; 1 PDD-NOS) versus 80% van de kinderen uit de controlegroep (15 autisme; een PDD-NOS) hadden dezelfde diagnoses voor en na de behandeling. In de controlegroep werd 20% van de kinderen voor de behandeling geclassificeerd als autistisch, maar na de behandeling met PDD-NOS versus 45% in de behandelgroep. Daarnaast werd 10% van de behandelgroep voor de behandeling gediagnosticeerd met PDD-NOS, terwijl deze na de behandeling werden geclassificeerd als niet-autistisch (versus geen in de controlegroep).

Op basis van hun IQ score had 45% van de kinderen in de behandelgroep een vergelijkbaar niveau VB voor en na de behandeling (één 'geen'; één lichte VB; drie matige VB, vier ernstige VB) versus 95% van de kinderen uit de controlegroep (één 'geen', twee lichte VB, vijf matige VB, tien ernstige VB; één diepe VB). Echter, in de behandelgroep nam bij 55% van de kinderen de ernst van de VB af (drie van diep naar ernstig; vijf van ernstig naar matig; twee van matig naar licht; één van zwakbegaafd naar geen) versus slechts 5% in de controlegroep (één van diep naar ernstig).

Schoolplaatsing

Aangezien schoolplaatsing gezien kan worden als een maat voor cognitief en sociaal functioneren (Kazdin, 1993), werd na afronding van de behandeling informatie over de schoolplaatsing verzameld. Tijdens de basislijn bezochten alle kinderen een kinderdagcentrum of school voor kinderen met een VB. Na twee jaar werd één kind uit de behandelgroep binnen het reguliere onderwijs (5%) geplaatst,

één kind bezocht een school voor kinderen met een taalachterstand (5%), negen kinderen een kinderdagcentrum voor kinderen met een VB (45%) en negen kinderen een school voor kinderen met een VB (45%). In de controlegroep gingen negen kinderen naar een kinderdagcentrum voor kinderen met een VB (45%), één kind bezocht een medisch kinderdagverblijf (5%) en tien kinderen gingen naar een school voor kinderen met een VB (10%).

3.3 Voorspellers van vooruitgang

Om vast te stellen welke kindkenmerken gerelateerd zijn aan de vooruitgang gedurende LIGT zijn Pearson's correlaties berekend tussen de kindkenmerken bij de start van de behandeling (kalenderleeftijd, ontwikkelingsleeftijd, IQ, zelfredzaamheid, ernst van autisme, taal, vroege sociale communicatie, emotionele en gedragsproblemen, gedragsflexibiliteit) en de vooruitgang van de kinderen tussen de basislijn en de tweede follow-up (na twee jaar) op ontwikkelingsleeftijd, IQ, zelfredzaamheid, expressieve en receptieve taal, ernst van autisme (op zowel de ADOS en de CARS), emotionele en gedragsproblemen, gedragsflexibiliteit en opvoedingstress.

Resultaten zijn weergegeven in Tabel 5 en suggereren dat de behandeluren per week en ontwikkelingsleeftijd, IQ, zelfredzaamheid, spelvaardigheden en receptieve taal bij de start van de behandeling de vooruitgang van kinderen met ASS en een VB na twee jaar LIGT voorspellen.

Tabel 5: Pearson correlaties tussen de voorspellers en de vooruitgang op ontwikkelingsleeftijd, IQ, zelfredzaamheid, taal, autisme, emotionele en gedragsproblemen, gedragsflexibiliteit en opvoedingsstress bij de behandelgroep

Voorspeller	Vooruitgang tussen de basislijn en de tweede follow-up									
	OL	IQ	ZRH	RT	ET	AU-C	AU-A	EGP	Flex	Stress
Behandeluren per week	.62**	.34	.24	.35	.47*	.28	-.56*	-.24	.34	-.03
Kalenderleeftijd	-.08	.25	-.13	-.09	-.19	-.03	.37	-.18	-.43	-.80**
Ontwikkelingsleeftijd	.61**	.25	.57*	.36	.69**	.13	-.46*	-.05	-.13	-.17
IQ	.49*	-.02	.42	.28	.64**	.15	-.58**	.02	.13	.29
Adaptief gedrag	.55*	.29	.57*	.39	.48*	.16	-.40	-.01	-.22	-.51
Interpersoonlijke relaties	.31	.18	.44	.29	.49*	.27	-.18	-.13	-.05	.59*
Spel en vrije tijd	.54*	.36	.77**	.32	.55*	.06	-.45	-.03	-.17	-.27
Initiëren van JA	.16	-.04	.27	-.14	.17	-.25	-.09	-.16	-.58*	.34
Reageren op JA	.29	.04	.33	-.12	.18	.31	-.38	-.04	.11	-.22
Initiëren van verzoeken	.07	-.06	.11	.00	-.04	-.20	-.07	.25	.13	.23
Reageren op verzoeken	.38	.20	.22	.22	.35	-.48*	-.49*	-.03	.36	-.52
Initiëren van SI	-.23	-.16	.07	-.25	-.12	-.10	-.03	.37	-.59*	-.17
Reageren op SI	.52*	.28	.35	.19	.18	-.03	-.42	-.01	-.16	.05
Receptieve taal	.57**	.38	.44	.59**	.45*	.08	-.38	-.23	-.22	-.20
Expressieve taal	.58**	.18	.50*	-.05	.33	-.11	-.40	.33	-.06	.24
ASS Totaal (ADOS)	-.07	-.14	-.06	.26	.18	.44	-.11	-.04	.68*	-.26
ASS Ernst (CARS)	-.26	-.07	-.41	.00	-.20	-.24	.14	.11	-.39	.43
Emotionele en gedragsproblemen	.07	.21	-.11	-.19	-.14	-.25	.09	.17	-.68*	-.14
Gedragsflexibiliteit	.07	.03	.27	-.11	-.09	-.25	-.12	.32	.59*	-.31
Opvoedingsstress	.24	.21	.02	.25	.10	-.28	.11	.04	-.67*	-.23

Noot * $p < .05$; ** $p < .01$; OL = vooruitgang op ontwikkelingsleeftijd in maanden; IQ = vooruitgang op IQ; ZRH = vooruitgang op zelfredzaamheid in maanden; RT = vooruitgang op receptieve taal in maanden; ET = vooruitgang op expressieve taal in maanden; AU-C = verschil in ernst van autisme gemeten op de CARS; AU-A = verschil in ernst van autisme gemeten op de ADOS; EGP = verschil in emotionele en gedragsproblemen; flex = verschil in gedragsflexibiliteit; stress = verschil in opvoedingsstress; JA = joint attention; SI = sociale interactie.

4 Discussie

Kinderen die vier tot tien uur LIGT per week kregen, werden bij de start van de behandeling en na een en twee jaar behandeling vergeleken met een controlegroep die de reguliere behandeling op een kinderdagcentrum of school kreeg. In follow-up metingen hadden kinderen uit de behandelgroep een hoger IQ dan de kinderen die de reguliere behandeling kregen (een

gemiddeld verschil van negen punten). Daarnaast lieten kinderen uit de behandelgroep hogere scores zien op ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke vaardigheden, spel en receptieve taal. Ook werden in de behandelgroep tijdens de follow-up minder emotionele en gedragsproblemen en kenmerken van autisme gerapporteerd. Er werden geen significante verschillen tussen groepen

gevonden op expressieve taal, gedragsflexibiliteit en opvoedingsstress. De vooruitgang van de behandelgroep was het eerste jaar groter dan in het tweede jaar, hetgeen mogelijk het gevolg is van negen kinderen die hun behandeling na één jaar dienden te beëindigen.

In de behandelgroep liet 50% van de kinderen een betrouwbare en klinisch significante vooruitgang zien op ontwikkelingsleeftijd, 50% op receptieve taal en 77% op adaptief gedrag versus 30%, 25% en 39% van de kinderen uit de controlegroep. Ongeveer een derde van de kinderen in de behandelgroep liet een betrouwbare en klinische afname in autisme kenmerken zien op de ADOS versus 15% van de kinderen in de controle groep. Deze resultaten zijn in overeenstemming met eerder onderzoek over LIGT, waarin de behandelgroep meer vooruitgang liet zien dan de controlegroep op ontwikkelingsleeftijd (Eldevik et al., 2006; Peters-Scheffer et al., 2010), adaptief gedrag (Peters-Scheffer et al.) en receptieve taal (Eldevik et al.). In tegenstelling tot Eldevik et al. vonden wij geen significante verschillen tussen de groepen op expressieve taal.

De verschillen tussen de groepen gerapporteerd in onderhavige studie zijn aanzienlijk kleiner dan de verschillen gerapporteerd in studies waarin de behandeling intensiever werd aangeboden en waarin meer supervisie geboden werd. Dit is naar verwachting aangezien deze variabelen betere behandeluitkomsten voorspellen (o.a., Eikeseth et al., 2009; Granpeesheh et al., 2009; Lovaas, 1987; Sal lows & Graupner, 2005). Anderzijds kunnen deze bescheiden resultaten veroorzaakt wor-

den door kindkenmerken, zoals de kalenderleeftijd en het IQ bij de start van de behandeling. Onafhankelijk van het behandelprogramma is de prognose voor kinderen met een hoger IQ beter (Dietz, Swinkels, Buitelaar, Van Daalen, & Van Engeland, 2007; Eaves & Ho, 2004). Hoewel de studies van Eikeseth et al. (2002; 2007) laten zien dat oudere kinderen eveneens profiteren van gedragstherapeutische programma's, wordt een lagere kalenderleeftijd geassocieerd met betere behandeluitkomsten (Granpeesheh et al., 2009). Helaas hebben veel kinderen met ASS niet de mogelijkheid om voor de leeftijd van vier jaar in te stromen in een gedragstherapeutisch programma en onderzoek binnen praktijkinstellingen laat zien dat kinderen met een lager IQ en hogere kalenderleeftijd dan aanbevolen in deze programma's instromen. Daarom is meer onderzoek binnen deze relatief oudere en meer beperkte populatie noodzakelijk.

Zoals gebruikelijk bij toegepast onderzoek heeft de huidige studie enkele methodologische beperkingen. Er is geen gebruik gemaakt van een gerandomiseerd controlegroepdesign en de toewijzing aan de behandelgroep gebeurde op basis van de beschikbaarheid van LIGT op het kinderdagcentrum of de school. Voor elk kind uit de behandelgroep werd op basis van een databestand met basislijndata een kind met een vergelijkbaar IQ, leeftijd en ernst van ASS voor in de controlegroep geselecteerd. Dit resulteerde in twee groepen die voor de start van de behandeling zeer vergelijkbaar waren op diverse afhankelijke variabelen en gevolgd werden over dezelfde tijdsperiode. Op deze manier was het mogelijk om

een groep kinderen te vormen die voldeden aan de participatiecriteria en een andere behandeling kregen dan gedragstherapie. Dit bood ons de mogelijkheid om data te verzamelen in klinische praktijk onder gebruikelijke omstandigheden.

ASS heeft een behoorlijke impact op het functioneren van een gezin en leidt veelal tot verhoogde stress bij de opvoeders. Echter, net als in de meeste studies uitgevoerd bij kinderen met ASS richt deze studie zich voornamelijk op de uitkomsten van de kinderen en werden er met uitzondering van opvoedingsstress geen data verzameld over demografische kenmerken en het welbevinden van het gezin (copingstrategieën, [in]formele sociale steun, depressie). Het verzamelen van dergelijke data biedt een completer beeld van de resultaten aangezien bijvoorbeeld ouderstress gerelateerd is aan behandeluitkomsten (Osborne, McHugh, Saunders, & Reed, 2008) en ouders een cruciale rol vervullen in het financieren en faciliteren van het programma. Daarnaast spelen ouders een rol bij het generaliseren en behoud van nieuw verworven vaardigheden (Johnson & Hastings, 2002; Trudgeon & Carr, 2007).

Hoewel de lange termijn besparingen van gedragstherapeutische programma's de kosten lijken te overstijgen (Chasson, Harris, & Neely, 2007; Jacobson, Mulick, & Green, 1998; Peters-Scheffer, Didden, Korzilius, & Matson, 2012), bleek het verkrijgen van financiering voor het programma problematisch met als gevolg dat negen kinderen het programma moesten beëindigen voordat zij de volledige twee jaar behandeld waren. Door

de beperkte financiering bleek het werven van nieuwe participanten lastig waardoor de steekproefgrootte relatief klein bleef.

Deze studie heeft ook diverse sterke aspecten. De behandel- en controlegroep werden gematched op diverse variabelen die onafhankelijk van de behandeling voorspellend zijn voor de lange-termijn uitkomsten van kinderen met ASS. Zoals beschreven door Matson (2007) zijn nauwkeurig gematchte controle groepen essentieel in onderzoek naar vroegtijdige interventie, vooral omdat de ontwikkeling vaak plaats vindt in spurts en op bepaalde momenten in de ontwikkeling sneller verloopt dan op andere. Aanvullend werd de matching uitgevoerd door een persoon onafhankelijk van de studie en onbekend met follow-up metingen. Ook de betrouwbaarheid van de metingen werd geëvalueerd door personen onbekend met de andere testcores en groepstatus van het kind.

De diagnose ASS en VB werden gesteld door een clinicus onafhankelijk van de studie en de diagnoses werden bevestigd door goed onderbouwde diagnostische instrumenten als de MSEL, VABS, CARS en ADOS. Om te vermijden dat verschillen binnen en tussen de groepen toe te schrijven waren aan het gebruik van diverse onderzoeksinstrumenten, werd er gebruik gemaakt van een uniform diagnostiekprotocol. Aangezien kinderen met ASS een heterogene groep vormen zijn met betrekking tot behandeluitkomsten zowel individuele als groepsresultaten weergegeven. Ondanks het feit dat in deze studie LIGT geboden werd in een klinische setting, stellen drie observatoren de hoge procedurele betrouwbaarheid van de

behandeling vast. Dit is essentieel aangezien een lage procedurele betrouwbaarheid de variabiliteit van behandeluitkomsten kan verklaren (Holcombe, Wolery, & Snyder, 1997; Kelly, Green, & Sidman, 1998).

Toekomstig onderzoek dient zich te richten op hoe LIGT aangevuld dient te worden om tot een fulltime behandelprogramma te komen. Bijvoorbeeld, door het ontwikkelen van een groepsprogramma voor kinderen met ASS en het ontwikkelen van richtlijnen voor ouders en groepsleiders om in de dagelijkse situatie vaardigheden aan kinderen aan te leren en te generaliseren. Zoals eerder gesuggereerd door Sheinkopf and Siegel (1998) kan intensieve betrokkenheid van ouders, leerkrachten en groepsleiders bij gedragstherapeutische programma's compenseren voor de minder intensieve één-op-één behandeling, aangezien ouders de trainingstechnieken gebruiken, waardoor zij op informele wijze de behandeling uitbreiden buiten de formele sessies. Meer onderzoek is noodzakelijk om vast te stellen in welke mate ouders en leerkrachten de trainingstechnieken gebruiken om kinderen vaardigheden buiten de formele sessies aan te leren.

Samenvattend laten de resultaten van deze studie zien dat wanneer om praktische redenen (o.a. kosten, beschikbaarheid professionals) of zorgen omtrent de impact van de behandeling op het kind en de familie de intensiteit van de behandeling beperkt dient te worden, LIGT aangevuld met behandeling op een kinderdagcentrum of school een effectief alternatief kan zijn. Ondanks dat de kinderen in de behandelgroep minder uren behandeling ontvingen en bij de start een lager IQ en een hogere kalen-

derleeftijd hadden dan in de meeste andere studies, lieten zij een statistische en klinisch significante vooruitgang op ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel en receptieve taal zien in vergelijking tot kinderen met de reguliere behandeling.

Auteurs

Nienke Peters-Scheffer, Behavioural Science Institute, Radboud Universiteit Nijmegen en stichting De Driestroom, Elst

Robert Didden, Behavioural Science Institute, Radboud Universiteit Nijmegen en Trajectum, Zutphen

Monique Mulders, Stichting De Driestroom, Elst

Hubert Korzilius, Institute for Management Research, Radboud Universiteit Nijmegen NTZ

Noot: Dit onderzoek is uitgevoerd bij en gefinancierd door Stichting De Driestroom, Elst. We zijn de kinderen, ouders en medewerkers van de kinderdagcentra en scholen dankbaar voor hun bijdrage.

Literatuur

- Achenbach, T.M., & Rescorla, L.A. (2000). *Manual for the ASEBA preschool forms & profiles*. Burlington: University of Vermont.
- American Psychiatric Association (APA). (2000). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th edition*. DSM IV. Washington: APA.
- Ben-Itzhak, E., & Zachor, D.A. (2007). The effects of intellectual functioning and autism severity on outcome of early behavioral intervention for children with autism. *Research in Developmental Disabilities*, 28, 287-303.
- Ben-Itzhak, E., & Zachor, D.A. (2011). Who benefits from early intervention in autism spectrum disorders? *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 345-350.
- Bondy, A., & Frost, L. (2002). *A Picture's Worth*. Bethesda: Woodbine House.

-
- Castelloe, P., & Dawson, G. (1993). Subclassification of children with autism: A questionnaire based on Wing's Subgrouping Scheme. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 23, 229-241.
- Chasson, G.S., Harris, G.E., & Neely, W.J. (2007). Cost comparison of early intensive behavioral intervention and special education for children with autism. *Journal of Child and Family Studies*, 16, 401-413.
- Cicchetti, D.V. (1994). Guidelines, criteria, and rules of thumb for evaluating normed and standardized assessment instruments in psychology. *Psychological Assessment*, 6, 284-290.
- De Bildt, A.A., & Kraijer, D.W. (2003). *Vineland-Z. Sociale redzaamheidschaal voor kinderen en jeugdigen met een verstandelijke beperking*. Leiden: Pits.
- De Brock, A.J.L.L., Gerris, J.R.M., & Vermulst A.A. (1992). *NOSI: Nijmeegse Ouderlijke Stress Index*. Lisse: Swets en Zeitlinger.
- Dietz, C., Swinkels, S.H., Buitelaar, J.K., van Daalen, E., & van Engeland, H. (2007). Stability and change of IQ scores in preschool children diagnosed with autistic spectrum disorder. *European Child Adolescent Psychiatry*, 16, 405-10.
- Duker, P., Didden, R., & Sigafoos, J. (2004). *One-to-one training: Instructional procedures for learners with developmental disabilities*. Austin, TX: Pro-Ed.
- Dunn, L., & Dunn, L. (1997). *Peabody picture vocabulary test-revised*. Circle Pines: American Guidance Services.
- Eaves, L.C., & Ho, H.H. (2004). The very early identification of autism: Outcome to age 4 1/2-5. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 34, 367-378.
- Eikeseth, S. (2009). Outcome of comprehensive psycho-educational interventions for young children with autism. *Research in Developmental Disabilities*, 30, 158-178.
- Eikeseth, S., Hayward, D., Gale, C., Gitlesen, J., & Eldevik, S. (2009). Intensity of supervision and outcome for preschool aged children receiving early and intensive behavioral interventions: a preliminary study. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3, 67-73.
- Eikeseth, S., Smith, T., Jahr, E., & Eldevik, S. (2002). Intensive behavioral treatment at school for 4- to 7-year-old children with autism: A 1-year comparison controlled study. *Behavior Modification*, 26, 49-68.
- Eikeseth, S., Smith, T., Jahr, E., & Eldevik, S. (2007). Outcome for children with autism who began intensive behavioral treatment between ages 4 and 7: A comparison controlled study. *Behavior Modification*, 31, 264-278.
- Eldevik, S., Eikeseth, S., Jahr, E., & Smith, T. (2006). Effects of low-intensity behavioral treatment for children with autism and mental retardation. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36, 211-224.
- Eldevik, S., Hastings, R.P., Hughes, J.C., Jahr, E., Eikeseth, S., & Cross, S. (2009). Meta-Analysis of Early Intensive Behavioral Intervention for Children With Autism. *Journal of Clinical Child and Adolescent Psychology*, 38, 439-450.
- Eldevik, S., Hastings, R.P., Hughes, J.C., Jahr, E., Eikeseth, S., & Cross, S. (2010). Using participant data to extend the evidence base for intensive behavioral intervention for children with autism. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, 115, 381-405.
- Goldberg Edelson, M. (2006). Are the majority of Children with Autism mentally retarded? A systematic evaluation of the data. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities*, 21, 66-83.
- Granpeesheh, D., Tarbox, J., & Dixon, D.R. (2009). Applied behavior analytic interventions for children with autism: a description and review of treatment research. *Annals of Clinical Psychiatry*, 21, 162-173.
- Granpeesheh, D., Dixon, D.R., Tarbox, J., Kaplan, A.M., & Wilke, A.E. (2009). The effect of age and treatment intensity on behavioral intervention outcomes for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3, 1014-1022.
- Green, G., Brennan, L.C., & Fein, D. (2002). Intensive behavioral treatment for a toddler at high risk for autism. *Behavior Modification*, 26, 69-102.
- Green, V.A., Sigafoos, J., O'Reilly, M., Pituch, K., Didden, R., Lancioni, G., et al. (2007). Behavioral flexibility in individuals with autism: theory, assessment, and intervention. In: L. Zao (Ed.), *Autism Research Advances* (pp. 63-77). New York: Nova Science Publishers.
- Grindle, C.F., Kovshoff, H., Hastings, R.P., & Remington, B. (2009). Parents' experiences of home-based applied behavior analysis programs for young children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 42-56.
- Harris, S.L., & Handleman, J.S. (2000). Age and IQ at intake as predictors of placement for young children with autism: A four- to six-year follow-up. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30, 137-142.
- Hartley, S.L., Sikora, S.L., & McCoy, R. (2008). Prevalence of maladaptive behaviour in young children with autistic disorder. *Journal of Intellectual Disability Research*, 52, 819-829.
- Hayward, D.W., Gale, C.M., & Eikeseth, S. (2009). Intensive Behavioural Intervention for Young Children with Autism: A Research-Based Service Model. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 3, 571-580.
-

-
- Holcombe, A., Wolery, M., & Snyder, E. (1994). Effects of two levels of procedural fidelity with constant time delay on children's learning. *Journal of Behavioral Education, 4*, 49-73.
- Howlin, P., Goode, S., Hutton, J., & Rutter, M. (2004). Adult outcome for children with autism. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 45*, 212-229.
- Howlin, P., Magiati, I., & Charman, T. (2009). A systematic review of early intensive behavioral interventions for children with autism. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities, 114*, 23-41.
- Jacobson, J.W., Mulick, J.A., & Green, G. (1998). Cost-benefit estimates for early intensive behavioral intervention for young children with autism - General model and single state case. *Behavioral Interventions, 13*, 201-226.
- Jacobson, N.S., Roberts, L.J., Berns, S.B., & McGlinchey, J.B. (1999). Methods for defining and determining the clinical significance of treatment effects: description, application and alternatives. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 67*, 300-307.
- Jacobson, N.S., & Truax, P. (1991). Clinical significance: A statistical approach to defining meaningful change in psychotherapy research. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 59*, 12-19.
- Johnson, E., & Hastings, R.P. (2002). Facilitating factors and barriers to the implementation of intensive home-based behavioural intervention for young children with autism. *Child: Care, Health & Development, 28*, 123-129.
- Kelly, S., Green, G., & Sidman, M. (1998). Visual identity matching and auditory-visual matching: a procedural note. *Journal of Applied Behavior Analysis, 31*, 237-243.
- Koot, H.M., Oord, E.J.C.G. van den, Verhulst, F.C., & Boomsma, D.I. (1997). Behavioral and emotional problems in young preschoolers: cross-cultural testing of the validity of the Child Behavior Checklist/2-3. *Journal of Abnormal Child Psychology, 25*, 183-196.
- La Malfa, G., Lassi, S., Bertelli, M., Salvini, R., & Placidi, G. F. (2004). Autism and intellectual disability: A study of prevalence on a sample of the Italian population. *Journal of Intellectual Disability Research, 48*, 262-267.
- Leaf, R., & McEachin, J. (1999). *A Work in Progress*. DRL Books: New York.
- Lecargo, S.A., & Carr, J.E. (2008). Recommendations for reporting independent variables in outcome studies of early intensive behavioral intervention for autism. *Behavior Modification, 32*, 489-503.
- Lord, C., Rutter, M., DiLavore, P.C., & Risi, S. (2006). *Autism Diagnostic Observation Schedule*. Western Psychological Service: Los Angeles.
- Lovaas, O.I. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 55*, 3-9.
- Lovaas, O.I. (1993). The development of a treatment-research project for developmentally disabled and autistic children. *Journal of Applied Behavior Analysis, 26*, 617-630.
- Lovaas, O.I. (2003). *Teaching individuals with developmental delays: Basic intervention techniques*. Austin: Pro-Ed.
- Luiselli, J.K., Cannon, B.O. M., Ellis, J.T., & Sisson, R.W. (2000). Home-based behavioral intervention for young children with autism/ pervasive developmental disorder: A preliminary evaluation of outcome in relation to child age and intensity of service delivery. *Autism, 4*, 426-438.
- Matson, J.L. (2007). Determining treatment outcome in early intervention programs for autism spectrum disorders: A critical analysis of measurement issues in learning based interventions. *Research in Developmental Disabilities, 28*, 207-218.
- Matson, J.L., & Smith, K.R.M. (2008). Current status of intensive behavioral interventions for young children with autism and PDD-nos. *Research in Autism Spectrum Disorder, 2*, 60-74.
- McClintock, S., Hall, S., & Oliver, C. (2003). Risk markers associated with challenging behaviours in people with intellectual disabilities: A meta-analytic study. *Journal of Intellectual Disability Research, 47*, 405-416.
- Mordre, M., Groholt, B., Knudsen, A.K., Sponheim, E., Mykletun, A., & Myhre, A.M. (2012). Is long-term prognosis for pervasive developmental disorder not otherwise specified different from prognosis for autistic disorder? Findings from a 30-year follow-up study. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 6*, 920-928.
- Mudford, O.C., Martin, N.T., Eikeseth, S., & Bibby, P. (2001). Parent-managed behavioral treatment for preschool children with autism: some characteristics of the necessary strength of behavioral treatments for severe behavior problems. *Journal of Developmental and Physical Disabilities, 9*, 1-16.
- Mullen, E.M. (1995). *Mullen scales of early learning: AGS edition*. Minneapolis: Pearson.
- Mundy, P., Delgado, C., Block, J., Venezia, M., Hogan, A., & Seibert, J. (2003). *A Manual for the Abridged Early Social Communication Scales (ESCS)*. Verkregen op 1 maart 2011 van http://www.ucdmc.ucdavis.edu/mind-institute/ourteam/faculty_staff/ESCS.pdf.
- Osborne, L.A., McHugh, L., Saunders, J., & Reed, P. (2008). Parenting stress reduces the effectiveness of
-

- early teaching interventions for autistic spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1092-1103.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Green, V.A., Sigafoos, J., Korzilius, H.P.L.M., Pituch, K.A., et al. (2008). The behavior flexibility rating scale-revised (BFRS-R): Factor analysis, internal consistency, inter-rater and intra-rater reliability, and convergent validity. *Research in Developmental Disabilities*, 29, 398-407.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., & Korzilius, H. (2012). Maternal Stress predicted by Characteristics of Children with Autism Spectrum Disorder and Intellectual Disability. *Research in Autism Spectrum Disorder*, 6, 696-706.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Korzilius, H., & Matson, J.L. (2012). Cost Comparison of Early Intensive Behavioral Intervention and Special Education for Children with Autism Spectrum Disorder in the Netherlands. *Research in Developmental Disabilities*, 33, 1763-1772.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Korzilius, H., & Sturmey, P. (2011). A meta-analytic study on the effectiveness of comprehensive ABA-based early intervention programs for children with autism spectrum disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 60-69.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Korzilius, H., & Sturmey, P. Characteristics of staff associated with the procedural fidelity of early behavioral intervention delivered to children with autism spectrum disorder and intellectual disability. *Manuscript ingediend voor publicatie*.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Mulders, M., & Korzilius, H. (2010). Low intensity behavioral treatment supplementing preschool services for young children with autism spectrum disorders and intellectual disability. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 1678-1684.
- Peters-Scheffer, N.C., Didden, R., Sigafoos, J., Green, V.A., & Korzilius, H. Behavioral flexibility in children with autism spectrum disorder and intellectual disability. *Manuscript ingediend voor publicatie*.
- Pituch, K.A., Green, V.A., Sigafoos, J., Itchon, J., O'Reilly, M., Lancioni, G., & Didden, R. (2007). Factor structure of the behavior flexibility rating scale. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 1, 55-66.
- Reed, P., Osborne, L.A., & Corness, M. (2007). Relative effectiveness of different home-based behavioral approaches to early teaching intervention. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 1815-1821.
- Reichow, B., & Wolery, M. (2009). Comprehensive Synthesis of Early Intensive Behavioral Interventions for Young Children with Autism Based on the UCLA Young Autism Project Model. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 39, 23-41.
- Remington, B., Hastings, R.P., Kovshoff, H., Espinosa, F., Jahr, E., Brown, T., et al. (2007). Early intensive behavioral intervention: Outcomes for children with autism and their parents after two years. *American Journal on Mental Retardation*, 112, 418-438.
- Salloos, G.O., & Graupner, T.D. (2005). Intensive behavioral treatment for children with autism: Four-year outcome and predictors. *American Journal of Mental Retardation*, 110, 417-438.
- Schlichting, J.E.P.T., Eldik, M.C.M. van, Lutje Spelberg, H.C., Meulen, S.J. van der, & Meulen, B.F. van der (1995). *Schlichting test voor taalproductie (Schlichting Test for Language Production)*. Nijmegen: Berkhout.
- Schopler, E., Mesibov, G.B., & Baker, A. (1982). Evaluation of treatment for autistic children and their parents. *Journal of the American Academy of Child Psychiatry*, 21, 262-267.
- Schopler, E., Reichler, R.J., & Rothen Renner, B. (2007). *The Childhood Autism Rating Scale*. Los Angeles: Western Psychology Services.
- Sheinkopf, S.J., & Siegel, B. (1998). Home based behavioral treatment of young children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28, 15-23.
- Smith, T., Groen, A.D., & Wynn, J.W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *American Journal of Mental Retardation*, 105, 269-285.
- Sparrow, S., Balla, D., & Cicchetti, D. (1984). *Vineland Adaptive Behavior Scales: Interview Edition*. Circle Pines, MN: American Guidance Service.
- Sparrow, S.S., Balla, D.A., & Cicchetti, D.V. (1998). *Vineland Social-Emotional Early Childhood Scales*. Circle Pines, MN: American Guidance Service.
- Trudgeon, C., & Carr, D. (2007). The impact of home-based early behavioural intervention programmes on families of children with autism. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 20, 285-96.
- Vismara, L.A. & Rogers, S.J. (2010). Behavioral treatments in autism spectrum disorder: what do we know? *Annual Review Clinical Psychology*, 6, 447-468.
- Yeargin-Allsop, M., Rice, C., Karapurkar, T., Doernberg, N., Boyle, C., & Murphy, C. (2003). The prevalence of Autism in a US Metropolitan area. *Journal of the American Medical Association*, 289, 49-55.
- Zachor, D.A., & Ben Itzhak, E. (2010). Treatment approach, autism severity and intervention outcome in young children. *Research in Autism Spectrum Disorder*, 4, 425-432.

Samenvatting

Om de effectiviteit van een laag intensieve gedragstherapie (LIGT) op cognitie, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel, taal, kenmerken van autisme, emotionele en gedragsproblemen, gedragsflexibiliteit, vroege sociale communicatie en opvoedingsstress bij kinderen met een autisme spectrum stoornis (ASS) en een verstandelijke beperking (VB) te onderzoeken is een behandelgroep ($n = 20$) die 4-10 uur LIGT per week ontving vergeleken met een controle groep ($n = 20$) die de reguliere behandeling kreeg. Tijdens de basislijnmeting werden er tussen de groepen (gemiddelde kalenderleeftijd: 5;3 jaar; gemiddelde ontwikkelingsleeftijd: 1;11 jaar) geen verschillen gevonden op diverse variabelen, maar na twee jaar interventie liet de behandelgroep meer vooruitgang dan de controle groep zien op IQ, ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel en receptieve taal. Daarnaast waren er minder autistische symptomen in de behandelgroep en was er in de behandelgroep een significante afname van gedragsproblemen over de tijd. Er werden geen significante verschillen tussen groepen gevonden op expressieve taal, gedragsflexibiliteit en opvoedingsstress. Vooruitgang in ontwikkelingsleeftijd, adaptief gedrag, interpersoonlijke relaties, spel en receptieve en expressieve taal was betrouwbaar en klinisch significant voor het merendeel van de behandelgroep.

Summary

To determine the effectiveness of low intensity behavioral treatment (LIBT) supplementing regular treatment in young children with autism spectrum disorder (ASD) and intellectual disability (ID) standardized tests of cognition, adaptive behavior, interpersonal relations, play, language, characteristics of autism, emotional and behavioral problems, behavioral flexibility, early social communication and maternal stress were administered in a treatment group ($n = 20$), receiving 4-10 hours LIBT per week and a control group ($n = 20$) receiving treatment as usual. At baseline no differences were found between groups (mean chronological age: 5;3 years; mean developmental age: 1;11 years) on several key variables, but after two years of intervention the treatment group outperformed the control group on IQ, developmental age, adaptive behavior, interpersonal relations, play and receptive language, and less autistic symptoms were seen in treatment group. Following intervention, no differences between groups were found on expressive language, behavioral flexibility and maternal stress. Progress in developmental age, adaptive behavior, interpersonal relations, play and receptive and expressive language was clinically and reliably significant for the majority of the LIBT group.